

昭和医会誌 第70巻 第5号〔424-429頁, 2010〕

症例報告

卵管癌に合併した皮膚筋炎における
重度嚥下障害のリハビリテーションの経験

— 急性期から慢性期に至るリハ経過の変化 —

昭和大学医学部リハビリテーション科学教室

松宮 敏恵 依田 光正 小野 玄
川手 信行 水間 正澄

要約：62歳女性。両下腿の筋肉痛、全身筋力低下、を訴え受診。精査の結果皮膚筋炎と診断されX年5月入院となった。内科治療開始後画像所見で右卵巣周囲および腹腔内に腫瘤を多数認め卵巣癌疑いで婦人科転科後開腹術施行したところ右卵管癌と診断され腫瘍摘出術施行された。術後免疫抑制療法、抗癌治療にて卵管癌再発は認めずX+1年1月退院した。入院の翌日リハビリテーション（以下リハ）依頼があった。四肢体幹の重度筋力低下および嚥下障害を合併していた。ベッド上でもリハ開始と共に定期的な嚥下機能評価と摂食機能療法を行いつつ、嚥下機能改善に伴い食事形態を上げていった。10月には常食摂取可能レベルとなり、誤嚥性肺炎発症の合併も防ぐことができた。屋内外で監視見守りでT字杖歩行にて退院した。皮膚筋炎は比較的稀な疾患であるが、悪性腫瘍を併発する頻度は一般集団に比べ高い。また皮膚筋炎の嚥下障害の発生頻度も2～12%と少なくはなく、誤嚥性肺炎が原因となり死亡する例も多く報告されている。悪性腫瘍随伴性の皮膚筋炎のリハでは、悪性腫瘍の病状、治療経過に応じた四肢体幹の筋力強化と共に嚥下障害に対するアプローチが非常に重要であると考えられる。

キーワード：皮膚筋炎、リハビリテーション、嚥下障害、悪性腫瘍随伴性、卵管癌

皮膚筋炎における嚥下障害の発生頻度は2～12%と少なくはなく、誤嚥性肺炎による死亡例も高率に報告されている¹⁾。一方、皮膚筋炎に悪性腫瘍が随伴する頻度は、発症年齢50歳以上では50%と一般集団の5～7倍と高率であるとされており²⁾、悪性腫瘍随伴皮膚筋炎においても嚥下障害へのアプローチは予後を左右する上で重要と思われる。しかし、悪性腫瘍随伴性皮膚筋炎の嚥下障害に対する具体的なアプローチや経過を追った報告は少ない。今回筆者らは、卵管癌に随伴した皮膚筋炎患者の重度嚥下障害に対して、早期に嚥下訓練を開始することによって誤嚥性肺炎を予防し、速やかに嚥下機能の改善を果した症例を経験したので卵管癌の治療経過を含め報告する。

症 例

症例：62歳、女性。

主訴：筋肉痛、筋力低下、嚥下困難。

既往歴：特記事項なし。52歳時に閉経。

家族構成：夫は長期入院中であり、一年前から息子と二人暮らしである。

生活歴：フラダンス教室を自宅から徒歩圏内で経営。日中、息子は仕事のため不在であり、家事は全て本人が行っていた。

家屋環境：築30年の一軒家で屋内に段差が多くある。

現病歴：X年4月上旬より両下腿の浮腫・疼痛・倦怠感および嚥下困難感を自覚していた。徐々に歩行困難感、全身の筋力低下が進行すると共に頭部保持困難、嚥下困難感の増悪が見られ5月18日39度の発熱で近医を受診し、炎症反応高値・血清CK6000 IU/L台と高値・肝機能障害を認め同日緊急入院となった。抗生物質治療を行うも症状は変わらず皮膚筋炎が疑われた。腹部CT上右付属器腫大、

Table 1 The problem lists in the rehabilitation

Disease	Malignancy associated with dermatomyositis	Fallopian tube carcinoma	
Impairment	Proximal muscle weakness	Weakness of swallowing associated muscle	
Disability	Distress of basic motion	Gait disturbance	Dysphagia
handicap	Self-employed	No support during daytime	Living in a spacious house

大動脈リンパ節腫大を認め婦人科系悪性腫瘍、腹腔内膿瘍等が疑われ精査加療目的に5月27日当院産婦人科に転院した。身体所見では四肢伸側の紅斑、四肢近位筋の筋力低下を認め、筋電図検査ではlow amplitude/short durationの筋原性パターン、筋生検では筋線維の壊死・再生・貪食像および筋の炎症所見を認めた。また、血清筋原性酵素(CK, アルドラーゼ)の上昇も認めたことなどから皮膚筋炎と診断された。

5月29日に筋力低下・嚥下障害に対し当科依頼となった。

当科初診時所見：意識は清明。呂律不良および開鼻声による軽度の構音障害を認めた。筋力は徒手筋力テスト(manual muscle testing: MMT)で頸部前屈2、後屈2、三角筋2、上腕二頭筋3、上腕三頭筋3、手関節背屈4、掌屈4、腸腰筋1、大腿四頭筋3-、ハムストリングス4、足関節屈曲4、伸張4と近位に優位の筋力低下があった。明らかな関節可動域制限は認めず、基本動作は、寝返り・起き上りは全介助、頭頸部を保持することができず、座位保持も困難であった。

ADL：食事は経鼻胃管栄養、排泄は床上でオムツを使用、更衣・整容・清潔保持はすべてに介助を要し、Barthel Indexは0点であった。摂食・嚥下機能は、開口1横指と開口障害があり、舌運動障害のため挺舌は下口唇越えなかった。咽頭反射は両側正常。空嚥下は可能で反復唾液嚥下テストは3回だが、嚥下時の喉頭挙上は不良でゼリー摂取で咽頭の不通過を訴え、飲水でムセを認めた。

問題点(Table 1)：重度の筋力低下のため、基本動作・ADLはすべて全介助が必要な状態であった。頸部の筋力低下のため座位保持ができず嚥下関連筋の筋力低下のため胃管栄養だった。また悪性腫瘍を

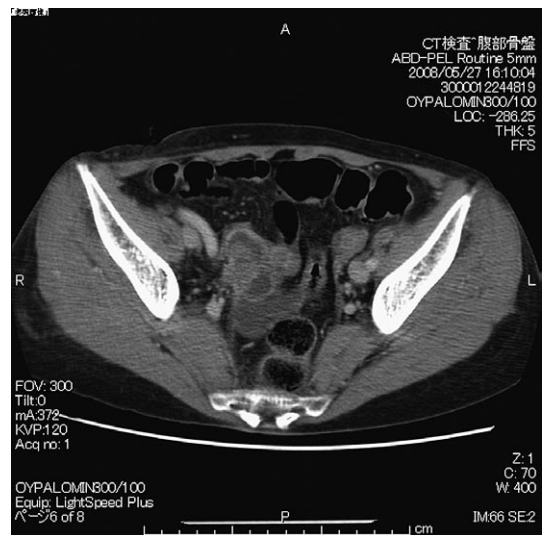


Fig. 1 Abdominal CT showed infiltration of right ovary and omentum. Several small mass lesions were observed in the intraperitoneal space.

随伴しており、病状から考えてもリハ・ゴールの設定が困難であった。リハ的観点からの問題点として疾患は卵管癌随伴性皮膚筋炎であり機能障害は四肢の近位筋優位の筋力低下および嚥下関連筋の筋力低下、能力障害は基本動作困難、歩行困難、ADL障害、および嚥下障害であり、社会的不利は段差の多い古い一軒家に日中独居となることであった。病前はフラダンス教室を経営しながら家事もこなすなどの高い活動レベルの生活をしており、社会復帰に難渋することが予想された(Fig. 1)。

リハ目標(Table 2)：短期目標として褥瘡・関節拘縮などの合併症の予防を行いながら、筋力強化および基本動作能力の向上を目指す。嚥下に関しても、誤嚥性肺炎の予防を主眼点に置きながら嚥下機能の

Table 2 The goals of rehabilitation

Short-term goal	Prevention of disuse syndrome (functional contracture, muscle weakness etc.)	Prevention of aspiration pneumonia	
Long-term goal	Improvement of ADL	Self tranfer activity	Self-support in domestic environment

Table 3 The approaches of the rehabilitation

Rehabilitation	Pre and during the treatment of the cancer	Post treatment of the cancer
Physical therapy	Range of motion exercise of hip, trunk and lower limbs Muscle training of trunk and lower limbs Training of basic motions	Walking exercise Muscle training of trunk and lower limbs
Occupational therapy	Range of motion exercise of neck, shoulder, upper limb and hands Muscle training of upper limbs	ADL training APDL training Muscle training of upper limbs
Dysphagia rehabilitaion	Assessment by the videofluoroscopic examination of swallowing Exercise of tongue, lip, jaw and swallowing	Diet modification

Rehabilitation was started the day before operation of the fallopian tube carcinoma. After the operation, 3 courses of chemotherapy was performed in 6 months. Rehabilitation of post treatment means that of after the chemotherapy was completed.

回復を図る。長期目標としては、家庭復帰を果たすため最低限の日常生活動作の自立・屋内移動の自立・食形態を調整しての完全経口摂取をゴールとした (Table 2)。

リハ・アプローチ (Table 3)：初期は理学療法とし、血清 CK 値に注意しながら関節可動域訓練・四肢体幹筋力訓練を行った。卵管癌術後は化学療法の副作用に注意しリハの負荷量調節をしつつ筋力訓練を施行した。基本動作自立となつてからは家庭復帰を目指し作業療法で ADL 訓練を開始した。嚥下リハは、初期は口腔ケア、咽頭アイスマッサージ、舌・口腔機能訓練などの嚥下間接訓練を中心とした摂食機能療法を行い、嚥下造影検査 (videofluoroscopic examination of swallowing; VF) で評価を行いながらゼリー嚥下可能となつてからは食物を用いた直接訓練を施行した (Table 3)。

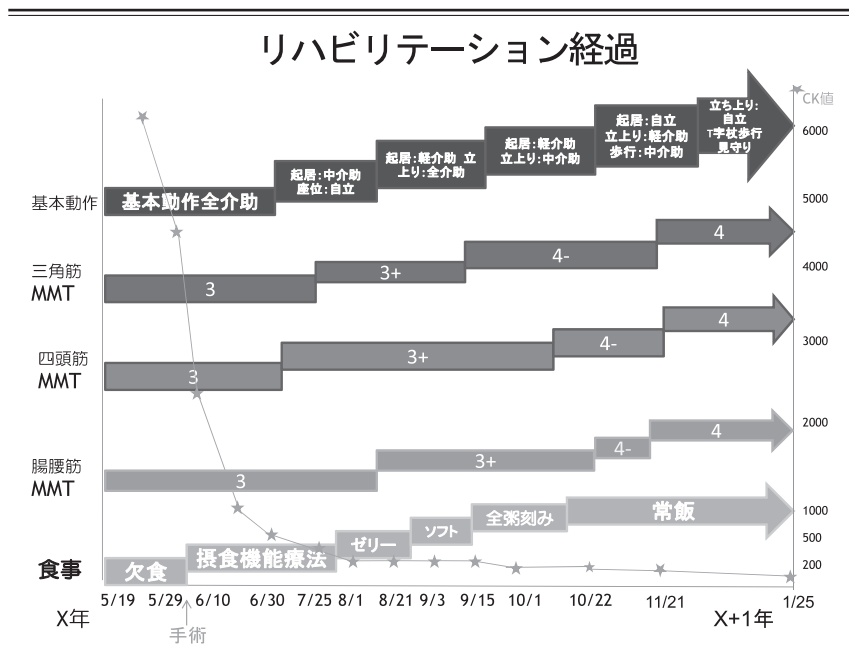
治療経過：5/29 入院後より皮膚筋炎に対しては薬物療法 (プレドニン、メトトレキセート、リウマトレックスの内服、大量ガンマ療法) が施行された。卵管癌に対しては 6 月 2 日両付属器、子宮、大

網摘出術施行され、術中所見より卵管癌と確定診断された。術後は化学療法 (TC 療法 6 クール) 施行された。CK 値は術直後に 2000 IU/l 台に低下しその後徐々に低下し 10 月 28 日には CK200 台とコントロール良好となった。化学療法 6 クール終了後の CT ではリンパ節および原発部位の再発は認められなかった。

リハ経過 (Table 4)：

理学療法：5 月 30 日ベッドサイドで理学療法および摂食機能療法開始。CK 値が 6000 IU/l 台と高値のためベッドサイドで ROM 訓練を中心に行い術後より座位訓練を開始した。初期は発症当初からの頸部、体幹、下肢近位筋力の著明な筋力低下に加え、術後の抗癌療法による好中球低下や CK 値の再増加によりリハ中止となることも多かった。そのため座位保持時間の延長に時間を要し、8 月 20 日ようやく 1 時間の座位保持が可能となりリハセンターでの訓練を開始した。その後は大腿四頭筋の筋力向上がみられ立ち上がり訓練、立位保持訓練を行い 10 月 20 日より平行棒を用いた歩行訓練を

Table 4 Rehabilitation progress



開始した。この時点で大腿四頭筋はMMT4まで改善していたが両腸腰筋はMMT2と低く歩行には重介助を要した。歩行訓練開始後、自宅復帰を目指し作業療法でADL訓練を開始した。上肢筋力の改善は比較的良好で、退院時には屋内ADLは自立レベルとなった。11月に入り軽介助下に歩行器歩行練習を開始した。12月中旬にはT字杖で軽介助下20m程度の歩行が可能となり、1月中旬にT字杖で歩行が自立しADL自立となり、BI100点にてX+1年1月25日自宅退院となった。

嚥下リハ；当初は胃管栄養中でありベッドサイドで間接的摂食機能療法から開始した。5月29日VF（初回）施行。口唇・下顎の開閉および舌運動不良のため咀嚼・食塊形成は不良であった。嚥下反射は惹起されるが舌根部・咽頭後壁の収縮が悪く、口腔内・咽頭残留が多量、ゼリーの嚥下も不可能であった。そのため発症後2か月間は食物を使用しない間接的嚥下訓練のみを行った。その後咽頭収縮、奥舌運動改善により7月末よりゼリーによる直接訓練から開始し、舌運動、咽頭収縮、喉頭挙上改善および食道入口部の食物通過が確認されたため8月15日から全粥・ソフト食の摂食開始、徐々に副食を刻み

食、一口大へと食事形態を上げていった。10月初旬のVFではさらに咀嚼機能および咽頭収縮の改善を認めトロミなし水分6mlの嚥下が可能となったため常食摂取が可能となった。

考 察

皮膚筋炎は、有病率は10万人あたり2人、年間発症率は100万人あたり2～5人程度と比較的稀な疾患である。発症年齢は35～55歳に多く、悪性腫瘍を合併率は7～34%と報告されており、一般集団の5～7倍と高率である³⁾。その中で皮膚筋炎に合併する悪性腫瘍の臓器は肺、乳房、消化管および婦人科系臓器が主に報告されている²⁻⁴⁾が、皮膚筋炎を伴った卵管癌は本邦ではおよそ2例が報告されているにすぎず、症例数が極めて少なく皮膚筋炎と卵管癌の関係についての知見は乏しい。また皮膚筋炎発見時の悪性腫瘍はstageⅢ、Ⅳと進行癌で予後不良なことが多いことが特徴とされる⁵⁾。金子らによれば皮膚筋炎の発症が悪性腫瘍発症に先行したものが82.4%であり⁶⁾、また、皮膚筋炎の嚥下障害発症率は21%、また1年生存率69%との報告もあり肺炎が原因で死亡する場合の死亡原因は誤嚥性肺炎

が有意に間質性肺炎よりも多いと言われている。

そのため肺炎を合併した皮膚筋炎患者の予後を左右する要因として誤嚥性肺炎の発症の予防は重要と言える。また、皮膚筋炎における嚥下障害合併率は悪性腫瘍随伴性では非随伴性に比べ高率との報告もあり⁹⁾、皮膚筋炎の中でも特に悪性腫瘍随伴性の症例では嚥下障害に対し早期からのアプローチが重要と考えられる。

本症例は皮膚筋炎の診断後精査にて進行期の卵管癌が発見された。皮膚筋炎診断直後より早期リハを開始したが卵管癌の治療後早期は全身状態不良のことが多く、機能改善・ゴールの予測が困難だった。そこで初期のゴール設定は主に二次的障害としての廃用症候群の予防とし、卵管癌治療終了後に家庭復帰、ADL 自立等ゴールの再設定を行った。リハは卵管癌摘出後の早期には化学療法、放射線療法の副作用がリハの弊害となることがあったため本人の全身状態に合わせた機能訓練を行う必要があった。悪性腫瘍随伴性皮膚筋炎では腫瘍の治療経過に合わせたリハが必要と思われるが、その中で誤嚥性肺炎を合併した場合、悪性腫瘍随伴患者の場合は非随伴患者と比較し全身状態が悪いことが多いため、肺炎の急性増悪が原因で死に至る可能性が高い。そのため肺炎を合併した悪性腫瘍随伴性皮膚筋炎患者においては誤嚥性肺炎の発症の予防は予後を左右する上でも非常に重要であり⁹⁾、皮膚筋炎の中でも特に悪性腫瘍随伴性の症例では嚥下障害に対し早期からのアプローチが必要と考えられる。本症例では、定期的な嚥下機能評価や発症早期からの摂食機能療法を実施することによって誤嚥性肺炎の合併を予防することができたので、卵管癌の治療経過および通常的能力改善と照らし合わせて報告した。

文 献

- 1) 佐藤賢一郎, 塚本健一, 佐藤太一, ほか: 皮膚筋炎合併卵巣癌に対する neojuvant chemotherapy の経験. 産婦人科 53 : 335-339, 1999.
- 2) Airio A, Pukkala E and Isomaki H: Elevated cancer incidence in patients with dermatomyositis: a population based study. *J Rheumatol* 22 : 1300-1303, 1995.
- 3) Sigurgeirsson B, Lindelof B, Edhag O, *et al*: Risk of cancer in patients with dermatomyositis or polymyositis. *N Engl J Med* 326 : 363-367, 1992.
- 4) Bernard P and Bonnetblanc JM: Dermatomyositis and malignancy. *J Invest Dermatol* 100 : 1285-1325, 1993.
- 5) Callen JP: Dermatomyositis and malignancy. *Clin Dermatol* 11 : 61-65, 1993.
- 6) Davis MD and Ahmed I: Ovarian malignancy in patients with dermatomyositis and polymyositis: a retrospective analysis of fourteen cases. *J Am Acad Dermatol* 37 : 730-733, 1997.
- 7) 金子佳世子, 菊池りか, 新井洋子: 皮膚筋炎と悪性腫瘍. 皮膚臨床 27 : 499-505, 1985.
- 8) 松宮敏恵, 青墳章代, 服部孝道: 傍腫瘍性皮膚筋炎, 日臨 (別冊神経症候群Ⅳ) 29 : 373-376, 2000.
- 9) Whitmore SE, Rosenshein NB and Provost TT: Ovarian cancer in patients with dermatomyositis. *Medicine* 73 : 153-160, 1994.
- 10) Oh TH, Bramfield KA, Hoskin TL, *et al*: Dysphagia in inflammatory myopathy: clinical characteristics, treatment strategies, and outcome in 62 patients. *Mayo Clin Proc* 82 : 441-447, 2007.
- 11) Ponyi A, Constantin T, Garami M, *et al*: Cancer-associated myositis: clinical features and prognostic signs. *Ann NY Acad Sci* 1051 : 64-71, 2005.
- 12) Klein RQ, Teal V, Taylor L, *et al*: Number, characteristics, and classification of patients with dermatomyositis seen by dermatology and rheumatology departments at a large tertiary medical center. *J Am Acad Dermatol* 57 : 937-943, 2007.
- 13) 横浜祐子, 渡辺まり子, 荻野元子, ほか: 皮膚筋炎患者の悪性腫瘍精査で卵管癌が発見された1症例. 北海道産婦会誌 51 : 44-45, 2007.
- 14) 小松成綱, 村上正基, 西 薫, ほか: KL-6 の上昇を伴った卵管癌合併皮膚筋炎の1例. 日皮会誌 116 : 472, 2006.

REHABILITATION OF DERMATOMYOSITIS WITH SEVERE DYSPHAGIA COMPLICATED WITH FALLOPIAN TUBE CARCINOMA

Toshie MATSUMIYA, Mitsumasa YODA, Gen ONO
Nobuyuki KAWATE and Masasumi MIZUMA

Department of Rehabilitation, Showa University School of Medicine

Abstract — Dermatomyositis (DM) is a rare inflammatory myopathy with characteristic skin manifestations and an increased incidence of internal malignancies. Some cases with DM are complicated with dysphagia leading to death caused by aspiration pneumonia. Primary fallopian tube carcinoma (FTC) is the least common site of origin for a malignant neoplasm of the female genital tract. Also, there are few reports describing cases of rehabilitation of DM with FTC. This report describes the first documented case of DM and concurrent FTC. Case: A 62-year-old woman presented with DM complicated with dysphagia; she was subsequently found to have FTC. During her rehabilitation for dysphagia and functional strength improvements, underlying FTC was a disturbing factor. Conclusion: The appropriate approach toward dysphagia as well as functional improvement, should be performed for patients of DM, particularly in the cases associated with malignancy.

Key words: dermatomyositis, dysphagia, fallopian tube carcinoma, rehabilitation

[受付：8月20日，受理：9月27日，2010]